



TITLE:

腎血管筋脂肪腫の1例 - 本邦報告 147例の統計的考察 -

AUTHOR(S):

野口, 和美; 川上, 寧; 吉邑, 貞夫

CITATION:

野口, 和美 ...[et al]. 腎血管筋脂肪腫の1例 - 本邦報告147例の統計的考察
-. 泌尿器科紀要 1983, 29(3): 325-331

ISSUE DATE:

1983-03

URL:

<http://hdl.handle.net/2433/120135>

RIGHT:

腎血管筋脂肪腫の1例

— 本邦報告 147 例の統計的考察 —

小田原市立病院泌尿器科 (主任: 吉邑貞夫)

野 口 和 美*
川 上 寧
吉 邑 貞 夫ANGIOMYOLIPOMA: A CASE REPORT AND A STATISTICAL
STUDY OF 147 CASES IN JAPANESE LITERATURE

Kazumi NOGUCHI, Atsushi KAWAKAMI and Sadao YOSHIMURA

From the Department of Urology, Odawara Municipal Hospital, Odawara, Japan

A 32-year-old housewife with gross hematuria and right flank pain had excretory urography and angiography performed. A large right renal mass with neovascularity was demonstrated. Computerized tomography also revealed a large well-demarcated renal mass with low value of HU. Right nephrectomy was done and histopathological diagnosis was angiomyolipoma weighing 1100 g.

A statistical study was made on 147 cases of renal angiomyolipoma in the Japanese literature including this case. The male to female ratio was 1 to 2.9, and the average age of male and female patients was 37.8 and 39.0 years, respectively. Thirty-eight per cent of the cases were associated with tuberous sclerosis. The main clinical signs were flank pain, flank mass and hematuria. In 80% of the cases, nephrectomy was done because of the difficulty of preoperative differential diagnosis from renal cell carcinoma. Recently, CT and sonography have become a great help in diagnosing angiomyolipoma, because they can demonstrate the fat in the renal mass. Conservative or surgical treatment to save the kidney can be used more often when it becomes possible to make a clear differential diagnosis between angiomyolipoma and other malignant diseases.

はじめに

腎血管筋脂肪腫は結節性硬化症の合併腎病変としても知られ、従来腎細胞癌との術前鑑別診断が困難とされてきた。われわれは本症の1例を経験したので報告するとともに、本邦報告例147症例の統計的観察および術前診断に関する若干の文献的考察をおこなった。

症 例

患者: 川○ひ○子 32歳 女性
初診: 1981年11月27日
主訴: 右側腹部痛, 肉眼的血尿

既往歴: 13歳, 肝炎

家族歴: 特記すべきことなし

現病歴: 1981年11月13日 右側腹部痛および肉眼的血尿があり, 近医入院した。38°Cの発熱が4日間続いた。IVPにて異常を指摘され11月27日当科を紹介され, 12月1日に入院となった。

現症: 体格栄養中等度。全身の皮膚に異常所見を認めない。血圧 120/60 mmHg, 眼球結膜に黄疸は認められず, 眼瞼結膜に貧血を認めない。胸部理学的所見異常なし。腹部は平坦で軟。右側腹部に右腎下極と思われる腫瘍を触知し, 軽度の圧痛を認めたが, 移動性良好であり, 表面も平滑であった。尿管走行部, 膀胱部, 外性器に異常所見を認めず, リンパ節の腫脹も認められなかった。

*現 横浜市立大学病院泌尿器科

検査成績：血液所見；RBC $372 \times 10^4/\text{mm}^3$ ，WBC $6,100/\text{mm}^3$ ，白血球分画異常なし，(Hb 11.8 g/dl，Hct 34.7%，血小板 $32.1 \times 10^4/\text{mm}^3$ ，赤沈1時間 40 mm，2時間 80 mm，出血時間，凝固時間正常，血液生化学的検査；TP 7.5 g/dl，Alb 57.6%， $\alpha_1\text{gl}$ 4.0%， $\alpha_2\text{gl}$ 6.8%， βgl 13.0%， γgl 18.6%，GOT 21，GPT 14，LDH 507，ALP 5.7 (KAU)，T-Bil 0.5 mg/dl，TC 146 mg/dl，BUN 12 mg/dl，Cr 0.7 mg/dl，Na 146 mEq/l，K 4.5 mEq/l，Cl 109 mEq/l，CRP 1+，FBS 93 mg/dl，尿所見；蛋白(-)，糖(-)，ウロビリノーゲン正常，沈渣 RBC 1~2/HPF，WBC 1~2/HPF，EKG 異常なし，

X線学的検査所見；胸部異常なし，KUBにて異常な石灰化陰影を認めず，また透亮像をも認めなかった。IVPにて右腎盂腎杯の変形と右ネフログラムの腫大を認めた (Fig. 1)。腎動脈造影にてコイル状の腫瘍血管を腫瘍に一致して認めたが，やや粗な印象であった (Fig. 2)。CTにて周囲組織との境界明瞭にて low density の大きな腫瘍を右腎に認めた (Fig. 3)。

上記より，右腎悪性腫瘍の疑いにて12月8日に手術をおこなった。

手術所見；右腰部斜切開にて後腹膜腔に達した。右腎は著明に腫大していたが，腫瘍の周囲への浸潤および癒着は認められず，比較的容易に剝離摘出可能であった。また周囲リンパ節の腫大も認められなかった。手術時間1時間35分，出血量は 156 ml であった。摘

出標本の重量は 1,100 g であり，断面は黄褐色で腎のほぼ全体をしめ，上極および下極にわずかの正常腎組織を認めるのみであったが，腎被膜は破っておらず，一部出血壊死を生じていた (Fig. 4)。術後経過は順調であった。

病理組織学的所見；腫瘍はほとんどが成熟した脂肪組織であり，この中に平滑筋細胞をともなった小血管の集まりが散見され，血管筋脂肪腫と診断した (Fig. 5)。悪性像は認められなかった。

考 察

1. 統計的考察

われわれは Ochi ら¹⁾の集計した本邦報告例 113例にさらに今回1982年3月までの文献上調べえた33例および自験例を加えた147例に関し (Table 1)，統計的考察を試みた。男女比は1対2.9と女性に多く，年齢分布は男女とも30歳代にピークを有し，平均年齢はそれぞれ37.8歳，39.9歳であった (Fig. 6)。左右差は認められなかったが両側性のものが21%に認められた。結節性硬化症との合併例に両側性のものが多かった。結節性硬化症との合併はその記載の明確なものの135例中51例と38%に認められた。主訴は疼痛63%，腫瘍35%，血尿23%と腎癌の3大徴候と言われるものが上位をしめ，以下発熱，ショックなどであった (Table 2)。治療は腎摘出術が圧倒的に多くおこなわれ，片側性の症例に対してはほとんど腎摘出術がおこなわれていた。

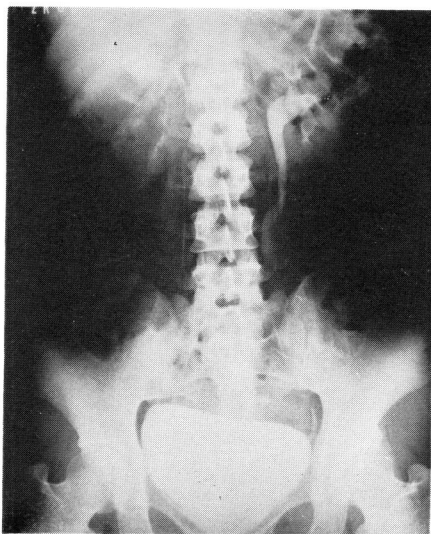


Fig. 1



Fig. 2



Fig. 3

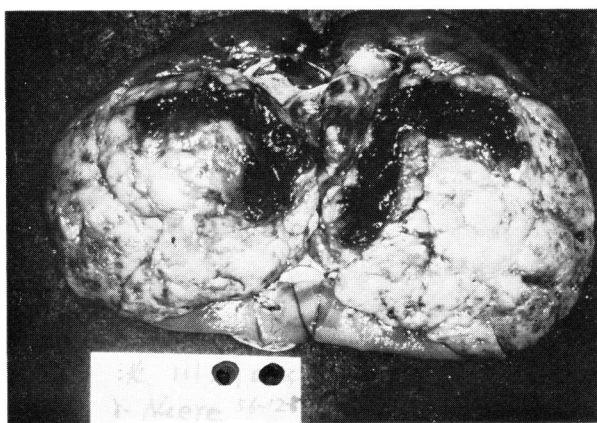


Fig. 4

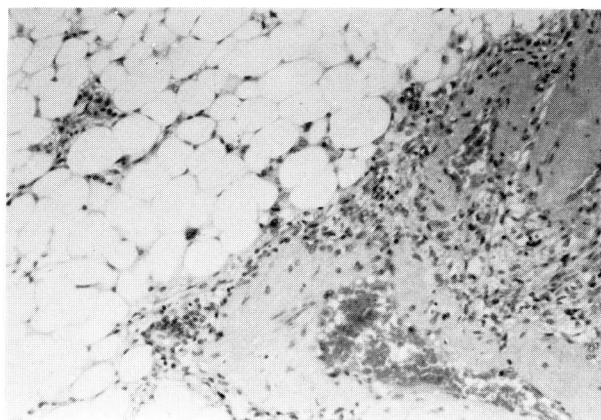


Fig. 5

Table 1

報告者	年齢	性	患側	主 訴	治療	文 献
1. 矢野・ほか	70	女	右	顕微鏡的血尿	腎摘	日泌 70-369, 1979
2. 中野・ほか	32	男	両側	側腹部痛	両腎生検	日泌 70-609, 1979
3. 斉藤	60	女	右	側腹部痛	腎摘	日泌 70-1186, 1979
4. 林・ほか	18	男	左	血尿	腎摘	日泌 70-840, 1979
5. 白石・ほか	28	女	左	側腹部痛	腎摘	日泌 70-1296, 1979
6. 有門・ほか	34	女	左	側腹部痛 ショック	腎摘	日泌 70-1309, 1979
7. 押・ほか	32	男	右	結節性硬化症	腎摘	日泌 70-1176, 1979
8. 押・ほか	54	女	左	側腹部痛発熱	腎摘	日泌 70-1176, 1979
9. 日時・ほか	26	女	右	側腹部痛	腎摘	西日泌尿41-739, 1979 日泌 70-956, 1979
10. 日時・ほか	50	女	右	側腹部痛	腎摘	西日泌尿41-739, 1979
11. 鈴木・ほか	40	男	両側	側腹部痛 ショック	生検	日泌 70-1176, 1979
12. 荒井・ほか	39	女	両側	側腹部痛	両腎部分切除	泌尿紀要25-805, 1979 日泌 71-435, 1980
13. 横川・ほか	37	女	左	側腹部腫瘍	腎摘	西日泌尿42-1199, 1980 日泌 72-392, 1981
14. 小田島・ほか	14	女	両側	側腹部痛発熱	両腎生検	日泌 71-1420, 1980
15. 小田島・ほか	14	女	右	側腹部腫瘍	腎摘	日泌 71-1420, 1980
16. 小田島・ほか	57	男	左	側腹部痛	腎摘	日泌 71-1420, 1980
17. 小田島・ほか	33	女	左	側腹部痛	腎摘	日泌 71-1420, 1980
18. 田村・ほか	43	女	右	血尿	腎摘	日泌 71-1412, 1980
19. 山田・ほか	26	女	右	側腹部腫瘍	腎摘	日泌 71-407, 1980
20. 松尾・ほか	40	女	左	側腹部痛	腎摘	日泌 71-1105, 1980
21. 松尾・ほか	30	女	右	側腹部痛	腎摘	日泌 71-1105, 1980
22. 石塚・ほか	55	女	左	側腹部痛	腎摘	西日泌尿41-1135, 1979 日泌 71-1105, 1980
23. 青柳・ほか	27	女	両側	側腹部痛	左腎生検	臨泌 35-371, 1981 日泌 71-820, 1980
24. 今村・ほか	22	男	両側	側腹部痛血尿	右腎摘	日泌 71-820, 1980
25. 山本・ほか	24	女	右	側腹部腫瘍	腎摘	日泌 71-803, 1980
26. 田中・ほか	48	女	左	側腹部腫瘍	腎摘	西日泌尿42-1336, 1980
27. 才田	36	男	右	側腹部腫瘍	腎摘	西日泌尿42-475, 1980
28. 橘・ほか	27	女	両側	腹部膨満	左腎摘	日泌 72-110, 1981
29. 元井・ほか	33	女	左	側腹部痛血尿	腎摘	日泌 72-945, 1981
30. 西田・ほか	25	女	両側	側腹部痛発熱	膿瘍ドレナージ	日泌 72-1100, 1981
31. 岩田・ほか	33	女	右	側腹部痛	左腎生検 腎摘	日泌 72-610, 1981
32. 坂本・ほか	48	女	左	側腹部腫瘍	腎摘	西日泌尿43-1107, 1981
33. 池田・ほか	32	女	不明	側腹部痛血尿	腎摘	西日泌尿43-1108, 1981
34. 自験例	32	女	右	側腹部痛血尿	腎摘	

両側性の症例に対し、腎部分切除術あるいはラドン針の打ち込みなどがおこなわれていた (Table 3)。

2. 腎癌との鑑別診断について

診断は、結節性硬化症を認める症例での腎腫瘍の場合においては、その50~80%に本症が合併すると言われており²⁾、とくに両側性の mass の場合には本症を念頭におくべきである。しかしながら合併疾患を有さない腎腫瘍の場合、本症と腎細胞癌とを鑑別することは従来困難であるとされてきた。が、最近の CT および超音波診断装置の出現によりこの問題は解決され

ようとしている。診断上本症の特徴とされるものを以下にあげる。

- a) 血液生化学所見：血清 LDH 値の高値³⁾
- b) 単純撮影：腹部単純撮影での hypodense (fatty) zones の存在^{2,4)}。単純撮影と血管造影での腫瘍陰影の相違³⁾。
- c) 腎血管造影 (Apitzsch ら⁵⁾の summary による)
 - ; (i) Hypervascular tumor with normal interlobar arteries (ii) Macro & microaneurysms occasionally arranged in clusters (iii) "Onion

skin" in the venous phase (iv) Multiple cyst-like regions (v) Prolonged arterial phase & absense of arteriovenous shunts

- d) Pharmacoangiography: epinephrine を混じた造影剤を使用して angiography をおこなった場合に vasoconstriction が得られない⁶⁾.
 e) CT scan: 脂肪組織は CT 値 -20 から -50 程度の low density を示す^{7,8)}.
 f) 超音波診断: 脂肪組織は豊富な内部エコーを示す^{9,10)}.

血管造影に関しては、腎癌と血管筋脂肪腫が合併し

Table 2. Signs and symptoms

FLANK PAIN	92 (62.6%)
FLANK MASS	53 (36.1%)
HEMATURIA	37 (25.2%)
FEVER	25
SHOCK	11
HYPERTENTION	4
GI MANIFESTATIONS	4
PROTEINURIA	3
NO SYMPTOM	7
UNKNOWN	3

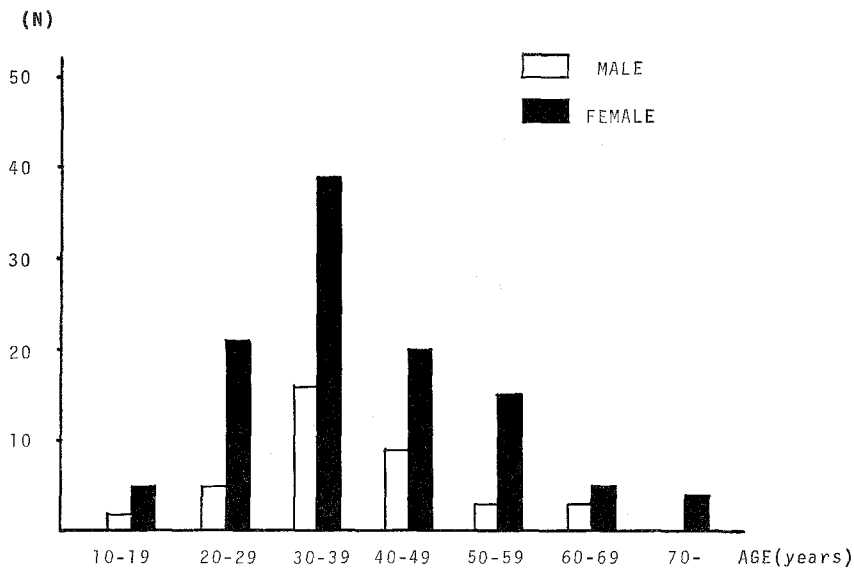


Fig. 6. Age distribution

Table 3. Treatment

NEPHRECTOMY (bilat.)	117 (2)
RENAL BIOPSY	14
PARTIAL NEPHRECTOMY	6
NEPHRECTOMY and CONTRALATERAL RENAL BIOPSY	2
NEPHRECTOMY and CONTRALATERAL PARTIAL NEPHRECTOMY	2
EXPLORATION	1
PARTIAL NEPHRECTOMY and CONTRALATERAL IMPLANTATION OF RADON SEED	1
UNKNOWN	4
TOTAL	147

た症例において retrospective にも、両者の鑑別診断は困難であったとの報告¹¹⁾をはじめ、血管造影のみでは本症と腎癌との鑑別診断は不可能であるとする意見が多く^{3,12-15)}、pharmacoangiography に関しても議論の余地が残されている¹⁶⁾。CT scan により腫瘍中の脂肪組織の有無を確実に診断できるようになり、さらに超音波診断を加えることにより、脂肪組織を含まない腎癌との確実な鑑別診断が可能となってきた。この両者により、直径 1.5 cm あるいは 2.0 cm の本症の腫瘍を術前に診断しえたとの報告も知られる^{10,17)}。Bosniak ら⁸⁾は本腫瘍を構成する3つの要素のうち、脂肪組織が多いものは CT および超音波診断装置によって、また血管組織が豊富なものは血管造影をおこないその特徴的な血管像によりそれぞれ診断が可能だが、筋組織に富む腫瘍の場合は X線診断上その特徴的所見がなく、術前診断が非常に困難であると述べている。また Stephens ら¹⁸⁾によれば、分化型の脂肪肉腫と本症との鑑別は CT によっては困難であり、脂肪肉腫はその血管像に乏しいことから、両者の鑑別には血管造影が必要であると述べている。すなわち、CT および超音波診断により脂肪組織を含む本疾患とそれを含み腎細胞癌との鑑別診断は可能だが、やはり従来おこなわれてきた血管造影も、他疾患との鑑別診断および、本疾患の治療方針を考える上でも、不可欠な検査であると言えよう。

3. 治 療

本疾患が良性腫瘍であることを考えると、可能なかぎり保存的治療が望ましい。しかしながら従来腎癌との術前鑑別診断が困難であったことから今回われわれが集計した症例においても、そのほとんどに腎摘出術がおこなわれていた。今後確実な術前診断が可能となれば、腫瘍切除、腎部分切除あるいは腫瘍そのものの保存的治療などが多くなるものと考えられるが、本腫瘍が血管腫の要素を含むことから出血しやすい性質があり¹⁹⁻²⁰⁾、shock の報告も 7.5% に認められ致命的ともなりうる疾患である。またごくまれには悪性化の報告もあり²²⁾厳重な経過観察が要求される。

結 語

- 1) 右腎に発生した腎血管筋脂肪腫の1例を報告した。
- 2) 1982年3月までの本邦報告例147例の統計的観察をおこなった。
- 3) 腎癌との術前鑑別診断について文献的考察をおこなった。

本論文の要旨は第410回日本泌尿器科学会東京地方会において発表した。

文 献

- 1) Ochi K, Nishino S, Fujita K, Watanabe K, Yokoyama M, Iwata H, Takaha M and Takeuchi M: Renal Angiomyolipoma. Nishinohon J Urol 43: 303~310, 1981
- 2) Frija J, Lardé D, Belloir C, Botto H, Martin N and Vasile N: Computed Tomography Diagnosis of Renal Angiomyolipoma. Journal of Computer Assisted Tomography 4: 843~846, 1980
- 3) 永田幹男・岡本重禮・藤岡知昭・鈴木敏幸・児島完治: 腎血管筋脂肪腫4例と臨床的考察一併せて本邦95症例の統計的検討一. 臨泌 33: 801~805, 1979
- 4) Baron M, Leiter E and Brendler H: Preoperative Diagnosis of Renal Angiomyolipoma. J Urol 117: 701~703, 1977
- 5) Apitzsch DE, Wegener O-H, Khalil M and Sorensen R: Advances in the Diagnosis of Renal Angiomyolipoma. Acta Radiologica Diagnosis 20: 105~110 (1979) Fasc. 1A
- 6) Palmisano PJ: Renal Hamartoma (Angiomyolipoma). Radiology 88: 249~252, 1967
- 7) Hansen GC, Hoffman RB, Sample WF and Becker R: Computed Tomography Diagnosis of Renal Angiomyolipoma. Radiology 128: 789~791, 1978
- 8) Bosniak MA: Angiomyolipoma (Hamartoma) of the Kidney: A Preoperative Diagnosis is Possible in Virtually Every Case. Urol Radiol 3: 135~142, 1981
- 9) Pitts WR Jr, Kazam E, Gray G and Vaughan ED Jr: Ultrasonography, Computerized Transaxial Tomography and Pathology of Angiomyolipoma of the Kidney: Solution to a Diagnostic Dilemma. J Urol 124: 907~909, 1980
- 10) Shawker TH, Horvath KL, Dunnick NR and Javadpour N: Renal Angiomyolipoma: Diagnosis by Combined Ultrasound and Computerized Tomography. J Urol 121: 675~676, 1979
- 11) Kavaney PB and Fielding J: Angiomyolipoma and renal cell carcinoma in same kidney. Urology 5: 643~646, 1975
- 12) 荒井陽一・朴 勺・岡部達士郎・小松洋輔・吉田 修: 結節性硬化症の不全型と考えられる両側腎血管筋脂肪腫の一例. 泌尿紀要 25: 805~811,

- 1979
- 13) 平石政治・津曲一郎・田尾 茂：両腎に Angiomyolipoma を合併した Bourneville-Pringle 母斑症の一例とその統計的考察. 臨泌 28: 41~47, 1974
- 14) 石塚源造・森田 隆・石田晃二・菅原道義：腎血管筋脂肪腫の一例. 西日泌尿 41: 1135~1139, 1979
- 15) 酒井俊助・説田 修・清水保夫：腎血管筋脂肪腫. 泌尿紀要 25: 271~277, 1979
- 16) Jander HP and Tonkin IL: Epinephrine Enhanced Renal Angiography in the Diagnosis of Hamartoma (Angiomyolipoma): A Re-evaluation. Radiology 132: 61~66, 1979
- 17) Duffy P, Ryan J and Aldous W: Ultrasound Demonstration of a 1.5 cm. Intrarenal Angiomyolipoma. J Clin Ultrasound 5: 111~113, 1977
- 18) Stephens DH, Sheedy PF II, Hattery RR and Williamson B Jr: Diagnosis and Evaluation of Retroperitoneal Tumors by Computed Tomography. Am J Rentgenol 129: 395~402, 1977
- 19) Beh WP, Barnhouse DH, Johnson SH III Marshall M Jr and Price SE Jr: A Renal Cause for Massive Retroperitoneal Hemorrhage —Renal Angiomyolipoma. J Urol 116: 372~374, 1976
- 20) Mouded IM, Tolia BM, Bernie JE and Newman HR: Symptomatic Renal Angiomyolipoma: Report of 8 Cases, 2 with Spontaneous Rupture. J Urol 119: 684~688, 1978
- 21) 岩本晃明・福島修司・松岡俊介・小川勝明：Bourneville-Pringle 母斑症に合併せる腎血管筋脂肪腫の一例. 西日泌尿 35: 845~854, 1978
- 22) 馬場谷勝広・青山秀雄・伊集院真澄・林威三雄・岡島英五郎・平松 侃・松井宏昭・大森高明：腎血管筋脂肪肉腫の一例. 泌尿紀要 22: 241~247, 1976

(1982年10月22日受付)